翼突下顎隙に認められた多形性腺腫の1例

笠井 唯 克・桑島 広太郎・田中 四 郎
毛利 謙 三・広瀬 尚 志・兼松 宣 武

A case of pleomorphic adenoma located in the pterygomandibular space

KASAI Tadakatsu・KUWAJIMA Kotaro・TANAKA Shiro
MOURI Kenzo・HIROSE Takashi・KANEMATSU Nobutake

Abstract: A 40-year-old woman presented with swelling and pain of the right buccal mucosa. The swelling protruded intraorally. An incisional biopsy revealed pleomorphic adenoma in the pterygomandibular space. The tumor was surgically removed via a mandibular swing approach. The entire resected specimen was submitted to histopathological evaluation, which showed solid and myxomatous areas, typical of pleomorphic adenoma, throughout the tumor specimen. No recurrence was observed during 3 years of follow up.

Key words: pterygomandibular space (翼突下顎隙), parapharyngeal space (側咽頭隙), pleomorphic adenoma (多形性腺腫)

緒 言

翼突下顎隙に腫瘍が発生することはまれであり、それらの組織型は神経原性腫瘍や肉腫等の報告が散見されている^{1～8)}。これらの腫瘍は隙の構成組織由来として矛盾しないが、今回、われわれは翼突下顎隙に認められた多形性腺腫の1例を経験した。そこで組織起源を中心に若干の考察を加えて報告する。

症 例

患 者：40歳、女性。

初診日：平成12年7月■日。

主 訴：右側上顎結節遠心頬側部の粘膜における腫脹と疼痛。

現病歴：4, 5年前より右側頬粘膜に腫瘤を触れた。平成12年7月■日頃、腫瘤発現部の頬粘膜を噛み、それに伴う腫瘤の増大と疼痛を主訴に当院を受診した。

初診時所見：右側上顎結節遠心頬側部から下顎枝前縁に沿い右側下顎臼後部までの粘膜が腫脹しており、同部粘膜

に咬傷によると思われる浅い潰瘍と接触痛を認めた(写真1)。腫脹は開閉口にて下顎骨と連動していた。その他、嚥下障害等は認められなかった。

既往歴：特になし。

パノラマ X 線所見：特に異常所見なし。

初期治療：咬傷による感染に対し、抗菌薬の内服投与を行ったところ、疼痛は消失したが、右側下顎臼後部の腫脹にはほとんど変化がなかったため、CTとMRI検査と穿刺吸引細胞診を行った。

CT, MRI 所見：右側下顎枝と内側翼突筋、外側翼突筋に囲まれた領域に類球形(大きさ $3.5 \times 3.5 \times 2.5\text{cm}$)の境界明瞭な腫瘤を認めた。腫瘤は前後的には下顎枝前縁から下顎枝後縁に及び、上下的には下顎切痕のやや上方から咬合平面よりやや下方にいたる範囲に及んでいた。また、腫瘤により外側翼突筋は上方に、内側翼突筋は内方に圧排されていた。腫瘤はMRI T1強調画像で中等度、T2強調画像で高信号を呈した(写真2)。また、CTにて下顎骨に骨吸収像は認められず、腫瘤のCT値は筋組織より低い値を示した。

穿刺吸引細胞診：Class III；多形性腺腫などの良性新生物を疑う。

確定診断にいたらなかったため、組織生検を行い、多形性腺腫と診断した。

手術日：平成12年11月■日。

朝日大学歯学部口腔病態医療学講座口腔外科学分野
(主任：兼松宣武教授)

Department of Oral and Maxillo-facial Surgery, Division of Oral Pathogenesis and Disease Control, School of Dentistry, Asahi University (Chief: Prof. KANEMATSU Nobutake)

受付日：2003年4月9日

採択日：2004年3月23日

手術法と所見：全身麻酔下にて下顎骨正中離断法で翼突下顎隙にアプローチする手法を用いた。下唇正中中部から右側顎下部にいたる皮膚切開を行い、頸部の皮膚切開部から

写真1 初診時の口腔内写真

右側上顎結節遠心～下顎臼後部にかけて弾性硬の腫瘍を触れ、腭隆部粘膜の一部に咬傷による浅い潰瘍を認めた。

外頸動脈を剖出し、腫瘍摘出時の出血を抑えるためにまず外頸動脈を結紮した。続いて、下顎骨を正中で離断した。同切断部より舌側歯頸部に沿って下顎右側第3大臼歯遠心部まで舌側歯肉を骨膜下にて剥離したのち、下顎骨を外下方へ牽引して、右側翼突下顎隙を展開した。生検部位の口腔粘膜を切除側に含めるように腫瘍上の口腔粘膜を切開し、腫瘍外側の切除は下顎枝内側の骨膜を含めた。腫瘍上方部は下顎切痕部を越えて存在しており、摘出に際しては筋突起が障害となるために、筋突起の切除を行った。腫瘍内側部は腫瘍の被膜に沿って剥離を試みたところ、内側翼突筋からの剥離は容易であった。また、上方の外側翼突筋からも容易に剥離され、腫瘍を前方に引き出しながら摘出した(写真3, 4)。(手術時間：7時間40分 出血量：209g)

病理組織学的診断および所見：腫瘍は被膜に被包され、紡錘形細胞と形質細胞様細胞で構成された充実性構造と粘液腫様構造を示す部分からなっていた。一部に認められた導管様構造の内部には好酸性物質が確認された(写真5a)。また明らかな核分裂像、異型性は認めないことから多形性

写真2 術前MRI (T2強調画像)

a：水平断像, b：aの拡大像, c：前額断像, d：cの拡大像。

★印は腫瘍, →印は下顎枝, ▲印は偏位した内側翼突筋を示す。

腫瘍はT2にて高信号を示し、下顎枝内側の骨に接して存在した。

写真3 術中写真

腫瘍の被膜を破らないように周囲より剥離し、腫瘍を前方へ牽引し摘出した。

腺腫と診断した。なお、ケラチンの免疫組織学的染色により、導管様構造を示す細胞は強陽性を示した (写真5b)。

経過：術後3年経過したが、現在のところ再発所見は認めない。

考 察

小唾液腺由来の多形性腺腫は口腔咽頭領域に発生する新生物の0.2%以下である^{9, 10)}。また、翼突下顎隙に腫瘍が発生することはまれであり、本邦で1983年以降に報告されている症例は、神経鞘腫3例¹⁻³⁾、横紋筋肉腫2例^{4, 5)}、滑膜肉腫1例⁶⁾、辺縁性エナメル上皮腫1例⁷⁾、血管腫1例⁸⁾であり、今回われわれが経験した多形性腺腫の報告例はない。本邦以外では翼突下顎隙の腫瘍の報告が1例もなく、そもそも、腫瘍の発生場所として翼突下顎隙という概

写真4 摘出標本(左)・摘出標本断面(右)

腫瘍は薄い皮膜で被われており、断面は淡黄白色を呈していた。

写真5 摘出標本の病理組織像

- a：H-E 染色 (×100) 腫瘍は紡錘形細胞と形質細胞様細胞で構成される充実性構造と粘液腫様構造を示す部分からなり、その一部の導管様構造内部には好酸性物質を認めた。
b：ケラチン免疫組織化学的染色 (×200) 導管様構造を示す細胞に強陽性を示した (↓印)。

念がないのかもしれない。なお、翼突下顎隙より広い範囲を示す解剖学的名称に側頭下窩 infratemporal fossa があるが、上顎臼歯後方に発生した多形性腺腫が側頭下窩まで及んだ報告は1例あり¹¹⁾、Eveson ら¹⁰⁾は小唾液腺腫瘍336例のうち臼歯後窩の多形性腺腫発生例が2例あったと報告しているが詳細は不明である。このように、今回われわれが経験した症例と同様の報告はないが、翼突下顎隙とは内側翼突筋で隔てられているにすぎない副咽頭隙においては、多形性腺腫が発生することはそれほどまれではない¹²⁾。そのため翼突下顎隙に発現した腫瘍が副咽頭隙腫瘍として扱われた症例があるかもしれない。

翼突下顎隙は深部であるため、この部位に発生した病巣の広がりや形態はCTやMRIの画像検査に頼らざるを得ず、発生頻度が少ないため文献の情報が少なく、診断は難しい。しかし、今回の症例では腫瘍の一部が口腔粘膜下までおよんでいたため、組織生検による術前診断が可能であった。

今回経験した翼突下顎隙腫瘍は病理組織学的検査にて多形性腺腫として診断された。多形性腺腫の発現頻度は耳下腺で最も多くみられ、顎下腺や小唾液腺にも発生する。また、副咽頭隙腫瘍の半数が唾液腺原発腫瘍であり、その多くは多形性腺腫が占めている¹²⁾。

本症例の発生母体についてであるが、腫瘍の存在した範囲が臼後腺のある口腔粘膜まで含んでいることから、本腫瘍の発生母体は臼後腺であることが考えられる。しかしながら本腫瘍の中心は口腔粘膜から離れた翼突下顎隙にあり、その点を考慮すると、翼突下顎隙に発生した異所性の唾液腺が本腫瘍の発生母体となった可能性も否定できない。それは、副咽頭隙に発生する多形性腺腫において、発生組織として耳下腺深葉とともに異所性唾液腺の存在が考えられている¹²⁾からである。

多形性腺腫は一般に被膜に覆われているが、その被膜は部分的には非常に薄くなっていることがあり、摘出に際しては被膜部を丁寧に取り扱い、決して粗雑な剥離は行わず、取り残しが起こらないようにすることが肝要である。本症例では、腫瘍の上方部は下顎切痕を越えており、翼突下顎隙より下顎骨の頬側面へ及んでいたため、下顎骨を正中で離断して術野を展開するとともに、筋突起を下顎切痕

の高さで切除し、腫瘍摘出に際してできる限り盲目的剥離を避けるように心掛けた。

結 語

今回われわれは、翼突下顎隙に認められた比較的大きな多形性腺腫を経験したので、その概要を報告した。

なお、本論文の要旨は第46回日本口腔外科学会総会（2001年、鹿児島市）において発表した。

引 用 文 献

- 1) 古沢清文, 浦出雅裕, 他: 下顎枝内面に著明な骨吸収を示した神経鞘腫の1例. 口科誌 35: 925-929 1986.
- 2) 仲嶺 均, 北島 正, 他: 翼突下顎隙に生じた神経鞘腫の1例 (抄). 日口外誌 45: 147 1999.
- 3) 前川幹男, 足立 尚, 他: 翼突下顎隙に発生した巨大な神経鞘腫の1例 (抄). 日口外誌 34: 198 1988.
- 4) 宮嶋洋二郎, 遊佐 浩, 他: 診断に苦慮した翼突下顎隙に発生した横紋筋肉腫の1例. 日口診誌 13: 122-126 2000.
- 5) 市川真弓, 宮手浩樹, 他: 翼突下顎隙にみられた横紋筋肉腫の1例. 日口外誌 43: 407-409 1997.
- 6) 水城春美, 戸高勝之, 他: 翼突下顎隙に発症した滑膜肉腫の1例. 口腔腫瘍 1: 35-40 1989.
- 7) 真田英太郎, 長谷川敏美, 他: 翼突下顎隙に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例—免疫組織化学的検討—. 日口外誌 35: 1599-1605 1989.
- 8) 海原真治, 別所和久, 他: 翼突下顎隙から顎下部・舌下部にわたる広範囲血管腫の合併が疑われた下顎前突症患者の1例. 日顎変形誌 8: 229-233 1998.
- 9) Leegaad, T. and Lindeman, H.: Salivary-gland tumors. Clinical picture and treatment. Acta Otolaryngol Suppl 263: 155-159 1969.
- 10) Eveson, J.W. and Cawson, R.A.: Tumours of the minor (oropharyngeal) salivary glands: a demographic study of 336 cases. J Oral Pathol 14: 500-509 1985.
- 11) Hirabayashi, S., Yanai, A., et al.: Huge pleomorphic adenoma of the upper retromolar area. Ann Plast Surg 38: 184-186 1997.
- 12) 西村俊郎, 古川 侃: 副咽頭間隙腫瘍の種類, 病理, 画像所見. 古川 侃編集: 新 図説耳鼻咽喉科・頭頸部外科講座 第5巻 頭頸部腫瘍. 第1版, メジカルビュー社, 東京, 2001, 202-205 頁.